

VU Research Portal

Obstetrical brachial plexus injury

Hoeksma, A.F.

2004

document version

Publisher's PDF, also known as Version of record

[Link to publication in VU Research Portal](#)

citation for published version (APA)

Hoeksma, A. F. (2004). *Obstetrical brachial plexus injury: Incidence, neurological recovery and shoulder complications*. [PhD-Thesis - Research and graduation internal, Vrije Universiteit Amsterdam].

General rights

Copyright and moral rights for the publications made accessible in the public portal are retained by the authors and/or other copyright owners and it is a condition of accessing publications that users recognise and abide by the legal requirements associated with these rights.

- Users may download and print one copy of any publication from the public portal for the purpose of private study or research.
- You may not further distribute the material or use it for any profit-making activity or commercial gain
- You may freely distribute the URL identifying the publication in the public portal ?

Take down policy

If you believe that this document breaches copyright please contact us providing details, and we will remove access to the work immediately and investigate your claim.

E-mail address:

vuresearchportal.ub@vu.nl

Summary

Summary

Chapter 1 describes the aim of this thesis, namely to obtain insight into three aspects of obstetrical brachial plexus injury (OBPI):

- the frequency of occurrence, and the expected incidence in the future
- the neurological outcome, with the identification of possible prognostic factors
- shoulder complications, with the search for possible predicting factors

These aspects are studied separately and also in terms of their interdependent association.

The overall aim was to use this information, to improve treatment in order to achieve maximal active and passive range of motion.

Chapter 2 addresses a study that was carried out to determine the incidence of OBPI and possible predicting factors. In a cohort of all liveborn babies in the Academic Medical Center (AMC) in Amsterdam during a period of 9 years, the incidence was 0.46% (62 children with an OBPI out of 13,366 liveborns). Using case notes from the medical records, we found that seventeen (27%) did not recover completely. Birth weight, female gender, second stage > 60 minutes, diabetes, multiparity, maternal age ≥ 35 years, and non-Caucasian origin were important risk factors for non-recovered OBPI. A model without birth weight, which can not be measured accurately antepartum, is considerably less effective. Risk factors for all OBPI and for non-recovered OBPI were similar.

Our conclusion was that a predictive multivariate model is of limited value, for all children with an OBPI and also for non-recovered OBPI cases.

Chapter 3 addresses a study, with the same cohort as that in Chapter 2, that focused on the neurological recovery and the frequency of shoulder contractures. Again, case notes from the medical records were used. Complete neurological recovery occurred in 73% of cases. Half of these children had a delayed recovery of more than three weeks, with a mean recovery time of 6.2 ± 3.1 months. Shoulder contracture was recorded in one-third of the children with a delayed neurological recovery and in two-thirds of those with incomplete neurological recovery.

Our conclusions were that careful neurological follow-up revealed a higher prevalence of incomplete neurological recovery than is generally described in the literature. Shoulder contractures were frequently recorded, even in children with complete but delayed neurological recovery.

The findings described in Chapter 3 stimulated us to complete a historical cohort study of all children with an OBPI born in the AMC during a period of 7 years. This cohort is described in Chapters 4 and 5. All children were treated equally, and evaluated at fixed time-intervals by one examiner. At the end of this study, the children were invited for a final physical and radiographic examination, and a short questionnaire on functional and cosmetic outcome was completed.

Chapter 4 focuses on the neurological recovery in this cohort. The aim was to investigate the rate and extent of neurological recovery and to identify possible prognostic factors. Complete neurological recovery occurred in 66% of the cases. In half of these children there was a delayed neurological recovery, with a mean recovery time of 6.5 ± 4.2 months. External rotation and supination were the last to recover, and recovered the least. Although biceps function at three months was considered to be the best indicator for operative treatment, active external rotation and supination at the same age were better in predicting eventual neurological recovery. Initial symptoms directly post partum were not found to be prognostic. Functional outcome was mainly reported to be good.

Chapter 5 focuses on shoulder complications. The aim was to determine the prevalences of contracture and osseous deformity of the shoulder, with their interdependent association, and to identify possible risk factors for these complications. The prevalence of a shoulder contracture of $>10^\circ$ was 56%, and the prevalence of an osseous deformity was 33%. In the children who had a complete but delayed neurological recovery, the prevalence of shoulder contracture was 54% and the prevalence of osseous deformity was 26%. A strong association was found between shoulder contracture and osseous deformity. Directly after birth, the presence of a clavicular fracture was the only symptom that was associated with the development of future osseous deformity (but not with shoulder contracture). At a later stage, rate and extent of neurological recovery were related to shoulder contracture and osseous deformity. An asymmetric appearance was noticed in children who had a contracture, including those who had achieved complete neurological recovery.

In conclusion: the prevalence of shoulder contracture and osseous deformity in children with an OBPI was high, even in those with complete neurological recovery. These complications were strongly associated with each other. No symptom that appeared immediately after birth was identified as a factor that would predict the development of a future shoulder contracture. A clavicular fracture was found to be significantly associated with the development of an osseous deformity at a later stage.

The last part of this thesis focuses on conservative treatment modalities; this concerns current treatment options, changes in treatment during the last century, and recommendations for the future.

Chapter 6 presents a case study of a child with a serious shoulder complication, despite complete neurological recovery. The case study is followed by a review of the literature from 1900 until 2001 on the conservative treatment of OBPI with respect to the prevention of shoulder complications. The descriptions of contractures and osseous deformities showed no important changes over time, other than that of more detailed images because of new technics. However, there was no agreement on an explanation for the development of these deformities. Secondary changes caused by muscular imbalance and longstanding contracture were recognised by all authors. A primary osteoarticular lesion was recognised as a possible cause at the beginning of the twentieth century, then forgotten for a long time, but regained interest in the 1980s. The main change in treatment concerns the use of arm braces. This was strongly recommended in the first half of the twentieth century, then advised against, and is now no longer even mentioned.

In conclusion, we found that there is no consensus on the cause of contractures and osseous deformities in children with an OBPI. Conservative methods of treatment have changed over the years, but no research has been carried out to investigate the outcome of these treatment changes.

Chapter 7, which is the General Discussion, is focused on the three aspects of OBPI that were described in Chapter 1, namely incidence, neurological recovery and shoulder complications. This is followed by some recommendations for the treatment of children with an OBPI, future research, and the organisation of the medical care for children with an OBPI in the Netherlands.

- The incidence of OBPI has increased in western countries, and will probably continue to increase in the future.
- Neurological recovery was defined as "normal strength in all muscle groups together with normal sensibility". Based on this definition, neurological recovery is not as favourable as is usually reported. Furthermore, one-third of all children with an OBPI need several months to achieve complete recovery. During this time, shoulder complications can occur, for which intensive treatment is required. For the prediction of neurological outcome, regular assessment of all movements is a prerequisite. When these assessments are documented, the parents can be informed about the prognosis of the neurological recovery of their child, and about the possible need for neurosurgical intervention, as two separate subjects.

- Shoulder complications occur frequently, even in children with complete but delayed neurological recovery. There is no agreement on the pathogenesis of these complications, for either contractures or osseous deformities. Treatment and preventive measures have changed over the years, with no research on the outcome.

Recommendations have been made regarding (1) the diagnosis and treatment of children with an OBPI, (2) future research into these aspects, and (3) the organisation of the medical care for children with an OBPI in the Netherlands.

Samenvatting

Samenvatting

Obstetrische plexus brachialis laesie (OPBL): incidentie, neurologisch herstel en schoudercomplicaties

Hoofdstuk 1 beschrijft het doel van dit proefschrift, namelijk het verkrijgen van inzicht in drie aspecten van OPBL:

- de incidentie en de verwachting daarvan in de toekomst
- de mate van neurologisch herstel, met identificatie van prognostische factoren
- schoudercomplicaties, met bestudering van eventuele risicofactoren

Het uiteindelijke doel hiervan is voldoende informatie te verkrijgen om de behandeling te verbeteren, gericht op maximale actieve en passieve bewegingsuitslagen.

Hoofdstuk 2 beschrijft een studie naar de incidentie van OPBL, met eventuele voorspellende factoren. In een cohort van alle (13.366) kinderen die in een periode van 9 jaar zijn geboren in het Academisch Medisch Centrum (AMC) te Amsterdam, hadden 62 een OPBL (de incidentie van OPBL was 0.46%). Uit de medische statussen werd gevonden dat 17 kinderen (27%) niet een volledig neurologisch herstel hadden laten zien. Geboortegewicht, vrouwelijke sekse, duur van de uitdrijving > 60 minuten, diabetes, multipariteit, leeftijd van de moeder ≥ 35 jaar, en non-Kaukasische herkomst van de moeder bleken belangrijke risicofactoren voor niet-herstellende OPBL. Een voorspellend model zónder het geboortegewicht bleek veel minder effectief dan met, terwijl het geboortegewicht antepartum niet betrouwbaar kan worden vastgesteld. De risicofactoren voor alle OPBL kinderen tezamen waren gelijk aan die voor diegenen met onvolledig neurologisch herstel.

Concluderend bleek een predictief multivariaat model van beperkte waarde te zijn, zowel ten aanzien van het voorspellen van alle OPBL kinderen als voor diegenen met onvolledig neurologisch herstel.

Hoofdstuk 3 beschrijft een studie van hetzelfde cohort als dat van Hoofdstuk 2, nu gericht op de mate van neurologisch herstel als ook op het optreden van schouder contracturen. Hiervoor zijn de gegevens uit de medische statussen gebruikt. Volledig neurologisch herstel werd beschreven in 73% van alle OPBL-kinderen. Bij de helft daarvan werd een vertraagd herstel van meer dan 3 weken gezien, met een gemiddelde hersteltijd van $6,2 \pm 3,1$ maanden. Schoudercontracturen waren beschreven bij een derde van de kinderen met een vertraagd

neurologisch herstel en bij tweederde van degenen met onvolledig neurologisch herstel.

Onze conclusies waren dat een zorgvuldige neurologische follow-up een minder rooskleurig beeld laat zien wat betreft het neurologisch herstel dan in het algemeen in de literatuur wordt beschreven. Schoudercontracturen waren frequent aanwezig, zelfs bij kinderen met een volledig maar vertraagd neurologisch herstel.

De bevindingen die zijn beschreven in Hoofdstuk 3, waren een stimulans om de cohortstudie voort te zetten, welke was gestart in 1991. Hierin werden alle kinderen die vanaf dat tijdstip met een OPBL waren geboren, op dezelfde wijze behandeld en op vaste tijdstippen gecontroleerd door één onderzoeker. Aan het eind van deze studie werden alle kinderen uitgenodigd voor een laatste lichamelijk onderzoek tezamen met röntgenonderzoek van de schouders en voor het beantwoorden van een korte vragenlijst gericht op functionaliteit en cosmetiek.

Hoofdstuk 4 is gericht op het neurologisch herstel in dit cohort. Het doel was om de snelheid en mate van het neurologisch herstel te onderzoeken, met identificatie van eventuele voorspellende factoren hiervoor. Volledig neurologisch herstel werd gezien bij 66% van de kinderen. Bij de helft daarvan was het herstel vertraagd (> 3 weken), met een gemiddelde hersteltijd van $6,5 \pm 4,2$ maanden. Van alle actieve bewegingsuitslagen, herstelden de exorotatie en supinatie het slechtst en het traagst. Alhoewel de bicepsfunctie op de leeftijd van 3 maanden beschouwd kan worden als de beste maat voor een eventuele operatieve behandeling, bleek actieve exorotatie en supinatie op dezelfde leeftijd van 3 maanden beter geschikt voor het voorspellen van het uiteindelijke neurologisch herstel. Direct na de geboorte bleken er geen symptomen te zijn die een voorspellende waarde hadden ten aanzien van het neurologisch herstel. Het functionele gebruik van de arm werd door de ouders in het algemeen als goed beoordeeld.

Hoofdstuk 5 is gericht op schoudercomplicaties bij OPBL, zoals gezien in het zelfde cohort als dat van hoofdstuk 4. Het doel was de prevalentie van schoudercontracturen en -deformiteiten vast te stellen, als ook hun onderlinge relatie, en om mogelijke risicofactoren hiervoor te vinden. De prevalentie van een schoudercontractuur van $> 10^\circ$ links-rechts verschil was 56% en de prevalentie van deformiteiten aan het schoudergewricht was 33%. Bij kinderen met een vertraagd compleet neurologisch herstel was de prevalentie van schoudercontracturen van $> 10^\circ$ 54% en van deformiteiten 26%. Er bleek een sterke associatie tussen schoudercontracturen en -deformiteiten. Direct bij de geboorte is een claviculafractuur het

enige symptoom dat was geassocieerd met de ontwikkeling van een schouderdeformiteit op latere leeftijd. Er was echter geen associatie tussen een claviculafractuur en een uiteindelijke schoudercontractuur. In een later stadium blijkt de mate en snelheid van het neurologisch herstel gerelateerd aan het ontstaan van een schoudercontractuur en -deformiteit. Alle ouders van kinderen met een contractuur gaven een asymmetrie in het uiterlijk van hun kind aan, zelfs bij kinderen met een volledig neurologisch herstel.

Concluderend was de prevalentie van schoudercontracturen en -deformiteiten bij kinderen met een OPBL hoog, zelfs bij kinderen met een volledig neurologisch herstel. Direct na de geboorte bleek geen enkel symptoom de ontwikkeling van een contractuur te kunnen voorspellen. Aanwezigheid van een claviculafractuur bleek wel significant geassocieerd met het ontstaan van een schouderdeformiteit op een later tijdstip.

Het laatste deel van dit proefschrift is gericht op de conservatieve behandeling. Het beschrijft het huidige beleid en veranderingen daarin in de loop van een eeuw. Daarna worden aanbevelingen voor de toekomst gedaan, gericht op de behandeling, toekomstig wetenschappelijk onderzoek en de organisatie van de medische zorg voor kinderen met een OPBL.

Hoofdstuk 6 begint met de beschrijving van een meisje met een ernstige schoudercomplicatie ondanks volledig neurologisch herstel. Dit wordt gevolgd door een review van de literatuur van 1900 tot 2001 betreffende de conservatieve behandeling van OBPI gericht op de preventie van schoudercomplicaties. De beschrijving van contracturen en deformiteiten aan de schouder bleek niet sterk te veranderen in de loop van de tijd, behalve dat er recentelijk meer gedetailleerde beelden worden gezien door een toename van technische mogelijkheden. Er blijkt echter geen eenduidigheid te bestaan wat betreft de oorzaak van de deformiteiten. Alle auteurs beschrijven dat ossale deformiteiten het gevolg kunnen zijn van langdurige contracturen, welke worden veroorzaakt door een dysbalans tussen spiergroepen. De mogelijkheid van een primaire bot- of gewrichtslaesie als direct geboortetrauma werd beschreven in het begin van de vorige eeuw, daarna langdurig genegeerd en is sinds de 80-er jaren weer in beeld gekomen. Wat betreft de behandeling is het gebruik van een arm-orthese de belangrijkste verandering in de loop van de tijd. Het gebruik hiervan werd sterk aanbevolen in de eerste helft van de vorige eeuw, daarna afgeraden en op dit moment wordt het niet meer genoemd als behandeloptie.

Concluderend, bleek er geen consensus te zijn wat betreft de oorzaak van contracturen en deformiteiten van de schouder bij kinderen met een OPBL. De conservatieve behandeling is

in de loop van de tijd gewijzigd, zonder dat onderzoek is verricht naar het effect van deze verandering.

Hoofdstuk 7 is de overkoepelende discussie aangaande de drie aspecten van OPBL welke in Hoofdstuk 1 zijn beschreven, namelijk de incidentie, het neurologisch herstel en het optreden van schoudercomplicaties. Hierna zijn aanbevelingen gedaan ten aanzien van de behandeling van kinderen met een OPBL, benodigd vervolgonderzoek, en de organisatie van de medische zorg in Nederland voor kinderen met een OPBL.

- De incidentie van OPBL in de westerse landen is toegenomen en zal waarschijnlijk blijven stijgen.
- Volledig neurologisch herstel is gedefinieerd als “normale spierkracht in alle spiergroepen tezamen met een normale sensibiliteit”. Op deze wijze gedefinieerd, blijkt het neurologisch herstel minder gunstig dan meestal is beschreven. Verder blijkt dat bij eenderde van de kinderen weliswaar volledig neurologisch herstel optreedt, maar pas na enkele maanden. In deze herstelperiode kunnen schoudercomplicaties ontstaan, welke intensieve behandeling vergen. Om de prognose van het neurologisch beeld te kunnen bepalen, is een regelmatige beoordeling van alle actieve bewegingsuitslagen geïndiceerd. Deze beschrijvingen kunnen goed worden gebruikt om de ouders te informeren over de prognose ten aanzien van het neurologisch herstel als ook over een eventuele indicatie tot operatief ingrijpen, als twee aparte items.
- Schoudercomplicaties komen vaak voor, ook bij kinderen met een volledig neurologisch herstel. Er is geen duidelijkheid betreffende de pathogenese van deze complicaties, noch wat betreft contracturen, noch wat betreft deformiteiten. De hierop gerichte preventieve maatregelen en behandeling zijn in de loop van de tijd veranderd, zonder dat onderzoek naar het effect van die verandering is verricht.

Aanbevelingen worden gedaan ten aanzien van (1) de diagnose en behandeling van kinderen met een OPBL, (2) verder wetenschappelijk onderzoek en (3) de organisatie van de medische zorg in Nederland voor kinderen met een OPBL.

Dankwoord

Dankwoord

Graag wil ik enkele mensen noemen die van belang zijn geweest bij het tot stand komen van dit proefschrift.

Voor mijn opleiding tot revalidatiearts zijn Hans Jongbloed en Eva Krabbenbos van groot belang geweest. Zij leerden mij het vak, de waarde en de betrekkelijkheid ervan, met altijd de nadruk op de praktische consequenties van ons handelen voor de patiënten.

Mijn baas en collega in het AMC te Amsterdam, Bareld de Jong, stimuleerde mij tot het doen van onderzoek. Steeds gaf hij een aanzet hiertoe, en liet mij dan weer zelf mijn keuzes daarin maken. Zo kon ik uiteindelijk toch mijn weg vinden in het doen van wetenschappelijk onderzoek. Mijn huidige collegae in het Jan van Breemen Instituut en het Slotervaart ziekenhuis te Amsterdam: Willemine Beuvink, Rutger Dahmen, Jos Dekker, Theo Nijssen, Leo Roorda, Patrice Tomassen, Joke Vollebregt en Bernard Vortman, ondersteunden mij inhoudelijk, praktisch en mentaal, wanneer ik het even niet meer zag zitten.

Met Truus Overweg-Plandsoen, als kinderneuroloog in het AMC, was het voortvarend samenwerken, zowel tijdens het ontwikkelen van ons eerste protocol voor doorverwijzing van kinderen met een Erbse parese, als bij het schrijven van het hoofdstuk over dit onderwerp in het leerboek "Kinderrevalidatie".

Tineke van Heuveln, Karin Koldewijn, Petra Tasseron en Rob de Vries zijn de kinderfysiotherapeuten die mij vooral in de beginperiode erg hebben geholpen. Gezamenlijk hebben we een brochure geschreven over de eerste weken na de geboorte van een kind met een Erbse parese. De tekeningen die we hiervoor hadden bedacht, en die door Astrid Sibbus van de Medische Fotografie en Illustratie in het AMC zo mooi zijn uitgewerkt, worden nog steeds door velen gebruikt in diapresentaties en brochures. Een ervan prijkt nu op de omslag van dit proefschrift. De samenwerking met meerdere andere kinderfysiotherapeuten en – ergotherapeuten heeft voor mij veel waarde. Van hen wil ik vooral Chris Kortink, in het Slotervaart ziekenhuis te Amsterdam, en Sonja Hofstede, in het LUMC te Leiden, noemen. Hans Wolf, gynaecoloog in het AMC, was erg belangrijk voor het initiëren en uitwerken van de eerste studie, naar de gynaecologische facetten van een obstetrisch plexus brachialis letsel. Dit onderzoek is met grote nauwgezetheid uitgewerkt door Sioe Lan Oei, toentertijd medisch studente.

Anne Marie ter Steeg, revalidatiearts in het Rijndam Revalidatiecentrum te Rotterdam, was mijn maatje in het belangrijkste onderzoek. Vanaf het ontwikkelen van de vraagstellingen

van het cohortonderzoek tot aan de uiteindelijke publicaties ervan was onze samenwerking steeds stimulerend en plezierig. In de beginfase zijn wij hierin uitgebreid begeleid door de organisatoren en leraren van de SGO-VRA opleiding "Wetenschappelijke vorming". Van hen wil ik vooral Pieter Leffers noemen. Voor de uitwerking en interpretatie van de röntgenologische gegevens was Piet Dijkstra, röntgenoloog in het AMC en het Jan van Breemen Instituut te Amsterdam, van wezenlijk belang. Anita Beelen, bewegingswetenschapper en epidemioloog in het AMC, later VU Medisch Centrum en nu weer AMC te Amsterdam, heeft erg veel geholpen: aanvankelijk met het opzetten van de database en later bij de bewerking en interpretatie van de data.

Guus Lankhorst, revalidatiearts in het VU Medisch Centrum te Amsterdam, was mijn promotor, die mij zeer deskundig heeft begeleid. De snelheid waarmee hij zijn commentaar op de manuscripten en antwoord op allerhande vragen gaf, was heel plezierig en ondersteunend. Rob Nelissen, orthopedisch chirurg in het LUMC te Leiden, was mijn copromotor, waar ik mij zeer gelukkig mee prijs. Zijn enthousiasme en zijn bereidheid om inhoudelijk steeds mee te denken waren van grote waarde voor mij.

Ook wil ik de kinderen en hun ouders hartelijk bedanken voor hun medewerking aan het onderzoek en de foto's in dit proefschrift.

En natuurlijk Jaap, die al die tijd met speelsheid en ernst zoveel aandacht gaf.

Curriculum Vitae

Agnes Hoeksma werd op 24 augustus 1952 geboren in Bussum. In 1971 behaalde ze het diploma gymnasium β aan het Goois Lyceum te Bussum.

Ze volgde de studie Geneeskunde aan de Vrije Universiteit te Amsterdam en behaalde daar in maart 1980 haar artsexamen. Haar specialisatie tot revalidatiearts deed ze van 1980 tot 1984 in het toenmalige Academisch Ziekenhuis Leiden en het Rijnlands Zeehospitium te Katwijk, met als opleider Prof J.C. Jongbloed.

Van januari 1985 tot november 1998 werkte ze in het Academisch Medisch Centrum te Amsterdam, als revalidatiearts, waarnemend hoofd afdeling revalidatie en (vanaf 1990) als waarnemend opleider. In diezelfde periode volgde ze van 1984 tot 1987 de opleiding Manuele Geneeskunde in Eindhoven en van 1996 tot 1997 de SGO-VRA opleiding "Wetenschappelijke vorming". Het wetenschappelijk onderzoek dat uiteindelijk resulteerde in dit proefschrift, werd in het AMC verricht.

Vanaf november 1998 werkt ze in het Jan van Breemen Instituut en het Slotervaart Ziekenhuis te Amsterdam, als revalidatiearts en waarnemend opleider.

Haar revalidatiegeneeskundige aandachtsgebieden zijn plexus brachialis laesies, acute en chronische handaandoeningen en neuropathische voetproblematiek.

